

Fetal alcohol spectrum disorders

Citation for published version (APA):

Roozen, S. (2019). *Fetal alcohol spectrum disorders: an important health problem in need of prevention*. Gildeprint Drukkerijen. <https://doi.org/10.26481/dis.20190130sr>

Document status and date:

Published: 01/01/2019

DOI:

[10.26481/dis.20190130sr](https://doi.org/10.26481/dis.20190130sr)

Document Version:

Publisher's PDF, also known as Version of record

Please check the document version of this publication:

- A submitted manuscript is the version of the article upon submission and before peer-review. There can be important differences between the submitted version and the official published version of record. People interested in the research are advised to contact the author for the final version of the publication, or visit the DOI to the publisher's website.
- The final author version and the galley proof are versions of the publication after peer review.
- The final published version features the final layout of the paper including the volume, issue and page numbers.

[Link to publication](#)

General rights

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal.

If the publication is distributed under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license above, please follow below link for the End User Agreement:

www.umlib.nl/taverne-license

Take down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us at:

repository@maastrichtuniversity.nl

providing details and we will investigate your claim.

Summary

APPENDIX

Fetal Alcohol Spectrum Disorders (FASD) are among the serious health problems affecting communities worldwide. FASD is an umbrella term used to describe a range of birth defects caused by prenatal exposure to ethyl alcohol. Drinking alcohol during pregnancy may harm the unborn child and therefore FASD is an important health concern in need of prevention. Developing successful health promoting programs first requires a thorough understanding of the problem using a multidisciplinary and multilevel approach.

This dissertation encompasses the following topics: (a) attention for a framework for developing health promoting programs; (b) gathering knowledge about the scope and significance of FASD; (c) a synthesis of the evidence base regarding maternal drinking behaviors associated with FASD; (d) an overview of what we know about why some pregnant women keep drinking and why others stop (psychosocial determinants); (e) providing a current status and a gap analysis of FASD knowledge with a focus on molecular pathways; (f) examining incontinence as one of the neglected pediatric problems of FASD; (g) and lastly, exploring the important topic of FASD-related stigma.

In **chapter 2**, an approach to effective FASD prevention was introduced. In this chapter a framework was described for systematic development of health promoting programs aimed at FASD prevention. The development of effective intervention programs is a complex process because there are gaps in our knowledge and there are complicated contextual factors. Therefore, an important first step in FASD prevention is conducting a needs assessment or problem analysis.

In **chapter 3**, an overview was provided of the global FASD prevalence estimates. Data were only available for a limited number of countries and displayed considerable heterogeneity. The FASD prevalence estimates are as high as 22.77 per 1,000 livebirths (prediction interval 0 to 176.77). The rates exceed prevalence rates of other common genetic disorders associated with intellectual disability such as Down syndrome. However, the rates should be interpreted with caution given the limitations of available data.

Chapter 4 addressed which maternal drinking behaviors are related to FASD based on a same systematic literature review approach. The relationship between maternal alcohol use and filial FASD health risks is not yet well understood. Substantial heterogeneity in applied measures for alcohol consumption hindered meta-analyses and guidance as to which prenatal alcohol drinking behavior(s) are most in need of intervention. It is speculated that severity of FASD may be dependent on the level, pattern, and timing of prenatal alcohol exposure before and during pregnancy. However, data precludes any conclusions as to such patterns.

In **chapter 5**, an overview of the available quantitative evidence as to why pregnant women consume alcohol was provided. Only a limited number of psychosocial determinants could

be identified. The most commonly studied determinants were risk perception, motivation to comply and attitude while determinants such as self-efficacy and response efficacy received little attention. Data precluded meta-analyses and it remains unknown as to which psychosocial determinants most strongly predict drinking behavior during pregnancy.

An overview of our current knowledge of molecular pathways leading to FASD was described in **chapter 6**. Available data showed a great complexity of influential mechanisms to be involved in FASD etiology. Our pathophysiological understanding of FASD, dose-response relationships, and reliable biomarkers remains limited, however.

In **chapter 7**, two studies were described to assess incontinence among FASD individuals in South Africa (**chapter 7A**) and Poland (**chapter 7B**). In both cohorts, the rates for individuals with a FASD were higher than for typically developing persons, but lower compared to individuals with special needs.

Chapter 8 addressed FASD-related stigma challenges. Women who drink during pregnancy, adoptive parents raising individuals with FASD, and FASD individuals may be subject to self-stigma, public-stigma, stigma-by-association, and structural stigma. However, literature and theory provide us with insufficient guidance to reduce FASD-related stigma.

Lastly, in **chapter 9**, a general discussion was provided to reflect upon the findings and their implications for FASD prevention with recommendations for future research. FASD is a serious health problem in need of prevention. For FASD prevention and management it is important to integrate scientific evidence and clinical expertise.

As illustrated in this thesis, for FASD prevention and the development of evidence-based FASD health promoting programs, there is ample room for improvement. Decisions about prioritizing research questions to pursue in the near future are important. The FASD topic requires a multidisciplinary and multilevel approach, emphasizing the reality of the complex interaction between research, practice, and policy.

APPENDIX

Samenvatting

APPENDIX

Het foetaal alcohol spectrum stoornis (FASD) is een ernstig en wereldwijd voorkomend gezondheidsprobleem. FASD is een overkoepelende term voor de aanduiding van geboorteafwijkingen veroorzaakt door prenatale blootstelling aan ethyl alcohol. Drinken van alcohol tijdens de zwangerschap kan het ongeboren kind schaden en daarom is preventie van belang. Het ontwikkelen van succesvolle gezondheidsbevorderende programma's vereist een grondige kennis van het probleem. Voor FASD is hierbij een multidisciplinaire aanpak noodzakelijk.

In dit proefschrift wordt aandacht besteed aan de volgende onderwerpen in relatie tot FASD: (a) beschrijving van een kader voor het ontwikkelen van gezondheidsbevorderende programma's; (b) het verzamelen van gegevens over de omvang en ernst van de problematiek; (c) drinkgedrag van de moeder tijdens de zwangerschap; (d) psychosociale determinanten (waarom sommige zwangere vrouwen blijven drinken); (e) de etiologie en pathogenese; (f) incontinentie als illustratie van een pediatriesch probleem; en ten slotte (g) de problematiek van stigma.

In **hoofdstuk 2** werd een kader beschreven voor de systematische ontwikkeling van gezondheidsbevorderende programma's gericht op FASD preventie. De ontwikkeling van effectieve interventieprogramma's is niet eenvoudig vanwege lacunes in onze kennis over de problematiek en de invloed van complicerende contextuele factoren. Een eerste belangrijke stap voor FASD preventie is het uitvoeren van een degelijke probleemanalyse.

In **hoofdstuk 3** werden FASD prevalentieschattingen gepresenteerd. Gegevens waren slechts beschikbaar voor een beperkt aantal landen. De methodieken van dataverzameling in de bestudeerde studies liepen uiteen. De berekende FASD prevalentieschatting was 22,77 per 1.000 levendgeborenen (voorspellingsinterval 0 tot 176,77). Een dergelijk prevalentiecijfer is beduidend hoger dan veel voorkomende genetische aandoeningen die gepaard gaan met verstandelijke beperking zoals bijvoorbeeld Down syndroom. De FASD prevalentiecijfers moeten echter voorzichtig worden geïnterpreteerd vanwege beperkingen van beschikbare gegevens.

Het drinkgedrag van de moeder gerelateerd aan FASD was onderwerp van **hoofdstuk 4**. Een systematisch onderzoek van de literatuur naar de relatie tussen alcoholgebruik door moeders en FASD-gezondheidsrisico's voor het kind leverde niet een duidelijk beeld op. Heterogeniteit in methodieken voor het registreren van alcoholgebruik belemmerde meta-analyses. Het aangeven van welk drinkgedrag nu interventie behoeft wordt hierdoor bemoeilijkt. De ernst van FASD kan afhankelijk zijn de hoeveelheid, het patroon en de timing van prenatale alcoholblootstelling vóór en tijdens de zwangerschap. Beschikbare gegevens sluiten vooralsnog duidelijke conclusies met betrekking tot de relatie van drinkgedrag en FASD uit.

Onderwerp van **hoofdstuk 5** was de vraag waarom zwangere vrouwen alcohol drinken. Op basis van beschikbare literatuur kon een beperkt aantal psychosociale determinanten worden

geïdentificeerd. De meest bestudeerde determinanten waren *risk perception*, *motivation to comply* en *attitude*, terwijl determinanten zoals *self-efficacy* en *response efficacy* weinig aandacht kregen. De beschikbare data maakte het niet mogelijk om meta-analyses te verrichten waardoor het onduidelijk blijft welke psychosociale determinanten het drinkgedrag tijdens de zwangerschap voorspellen.

De pathogenese van FASD werd beschreven in **hoofdstuk 6**. Beschikbare gegevens over etiologie en *moleculaire pathways* lieten een complexiteit van aan FASD gerelateerde mechanismen zien. Verder onderzoek naar de pathofysiologie van FASD, dosis-response relaties en betrouwbare biomarkers is gewenst.

In **hoofdstuk 7** werden twee studies beschreven gericht op het voorkomen van incontinentie bij personen met FASD. Een studie over incontinentie bij personen met FASD in Zuid-Afrika (**hoofdstuk 7A**) en een studie over incontinentie bij personen met FASD in Polen (**hoofdstuk 7B**). Uit beide studies bleek dat incontinentie bij FASD een probleem kan zijn. Incontinentie komt vaker voor bij FASD dan bij normaal ontwikkelende personen, maar minder dan bij personen met specifieke syndromen die gepaard gaan met een verstandelijke beperking.

In **hoofdstuk 8** werd aandacht besteed aan stigma in relatie tot FASD. Vrouwen die tijdens de zwangerschap drinken, adoptieouders van personen met FASD en FASD personen zelf kunnen van doen hebben met verschillende vormen van stigma zoals zelfstigma, publieke stigma, stigma-door-associatie en structureel stigma. FASD gerelateerde stigma is een serieus probleem. Beschikbare literatuur biedt nog onvoldoende aanknopingspunten voor het verminderen van FASD gerelateerde stigma.

Tot slot bevat **hoofdstuk 9** een algemene discussie met inbegrip van een valorisatie paragraaf. Bevindingen van de studies en de implicaties voor FASD preventie werden in een breder perspectief geplaatst met aanbevelingen voor toekomstig onderzoek. FASD is een ernstig gezondheidsprobleem dat kan worden voorkomen door preventie. Voor FASD preventie is het belangrijk wetenschappelijke bevindingen en klinische expertise te integreren.

Zoals uit dit proefschrift blijkt is er voor FASD preventie en de ontwikkeling van evidence-based FASD gezondheidsbevorderende programma's nog veel ruimte voor verbetering. Besluiten over prioritering van onderzoeksvragen in de nabije toekomst zijn belangrijk. FASD vereist een multidisciplinaire aanpak met analyses op meerdere niveaus, met uitdrukkelijke aandacht voor de realiteit van de complexe wisselwerking tussen onderzoek, praktijk en beleid.

APPENDIX